

術前に診断しえた瘻孔形成を伴う回腸原発 T 細胞性悪性リンパ腫の 1 例

国立小倉病院消化器病センター外科, 同 内科*, 産業医科大学第 2 病理**

自見政一郎 佛坂 正幸 松本 伸二 藤井 圭
柴田 恵介* 谷本 昭英** 武田 成彰

術前に診断しえた回腸原発 T 細胞性悪性リンパ腫の 1 例を経験した。症例は 64 歳の男性。主訴は便秘, 右下腹部痛。右下腹部痛の精査のため施行した注腸検査にて回盲部腫瘍を指摘された。小腸造影透視にて回腸末端に潰瘍性病変を認め, 回腸末端と上行結腸の間に瘻孔を認めた。ガリウムシンチにて右下腹部に集積を認めた。大腸内視鏡検査にて回腸末端に全周性の粗大結節と潰瘍形成が認められ, 生検にて T 細胞性悪性リンパ腫と術前に診断された。右半結腸切除術を施行した。切除標本にて異型細胞は消化管壁内に局限していた。術後に化学療法を 4 クール行った。術後 2 年 8 か月間経過した現在再発は認めていない。小腸原発の T 細胞性悪性リンパ腫はまれで, 報告例の多くは, 穿孔あるいは腸閉塞などで発症し, 緊急手術後の病理検査にて診断されている。瘻孔を形成した回腸原発 T 細胞性悪性リンパ腫と術前に診断しえた症例を文献的考察を加え報告する。

はじめに

小腸原発の T 細胞性悪性リンパ腫の過去の本邦症例報告は 17 例とまれである。本疾患は穿孔や腸閉塞など急性腹痛で発症し, 術後に病理組織学的検査にて診断されることが多い。術前診断が困難で, 小腸造影透視にて瘻孔形成を確認できた症例は少ない。今回, 術前に診断しえた瘻孔形成を伴う回腸原発 T 細胞性悪性リンパ腫の 1 例を経験したので報告する。

症 例

患者: 64 歳, 男性

主訴: 便秘, 右下腹部痛

既往歴: 58 歳時に前立腺肥大により手術。

家族歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 元来便秘傾向を示していた。右下腹部痛のため近医を受診し, 注腸検査を受け回盲部に腫瘍を指摘され, 当院へ紹介された。

入院時現症: 貧血黄疸なく, 血圧 136/82 mmHg, 脈拍 78/分で整脈であった。腹部は平坦で, 右下腹部に手拳大の腫瘍と圧痛を認めたが,

腹膜刺激症状は認めなかった。表在リンパ節は触知しなかった。

入院時検査所見: 末梢血液検査では白血球数は $9,100/\text{mm}^3$ と高値を呈した。しかし白血球分画, 血沈は正常範囲内であった。ヘモグロビン 11.0g/dl と軽度の貧血を認めた。生化学検査では Lactated dehydrogenase (LDH) 719IU/l , Soluble interleukin-2 receptor (以下, 可溶性 IL-2 受容体) 1173U/ml と上昇していた。C 型肝炎ウイルス, B 型肝炎ウイルス, 成人 T 細胞性白血病ウイルス, 梅毒は認めなかった。

胸部 X 線写真: 縦隔リンパ節の腫大は認めなかった。

注腸検査: 回腸末端に深い潰瘍形成と壁の硬化像を認め, 管外性の腫瘤形成と判断した。病変の肛門側は管外性に圧排されたと思われる平滑な陰影を上行結腸に認めた。

小腸造影透視: 回腸末端に深い潰瘍形成と約 10cm に渡る不整な壁の硬化像を認めた (Fig. 1a)。小腸には回腸末端以外に病変は指摘できなかった。回腸末端と上行結腸の間に透視上約 6cm の瘻孔を認めた (Fig. 1b)。回腸末端の病変は圧迫にて形状が変化し, 軟らかい印象であった。

< 2002 年 12 月 18 日受理 > 別刷請求先: 自見政一郎
〒802 8533 北九州市小倉南区春ヶ丘 10 1 国立小倉病院消化器病センター外科

Fig. 1 Radiographic study in the small intestine : Ulceration was seen in the terminal ileum (large arrow) A fistula was confirmed between the terminal ileum and the ascending colon (small arrow)

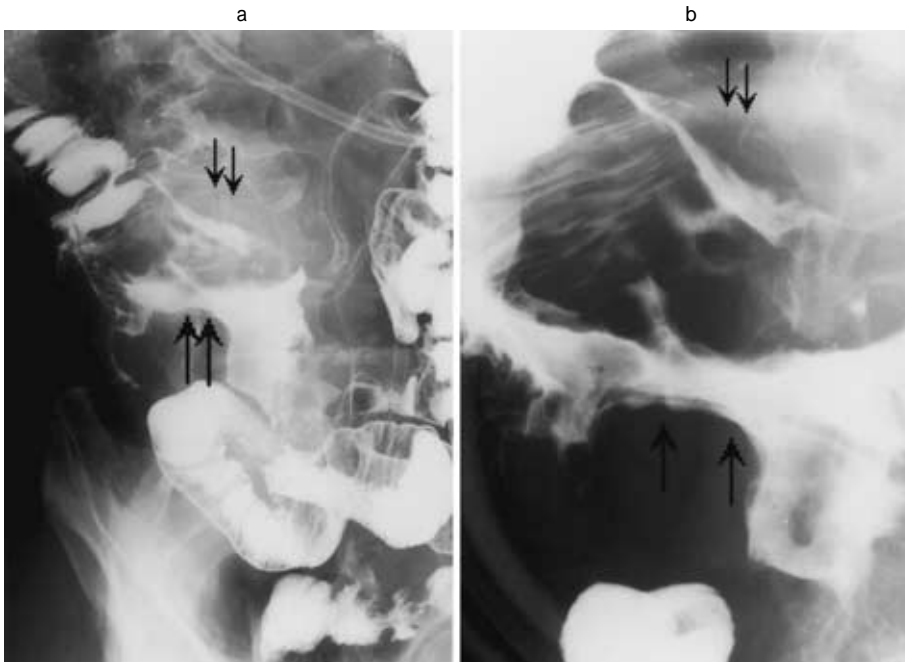


Fig. 2 CT : Intestinal wall of the terminal ileum and cecum was thickened (arrow)



ガリウムシンチ：右下腹部に集積を認めた。

腹部 CT 検査：肝臓，脾臓に異常は認めなかった。腹腔内に腫大したリンパ節を数個認めた。回腸末端部分の腸管に約 8cm にわたり全周性の壁の肥厚を認めた (Fig. 2)。

大腸内視鏡検査：回腸末端に全周性腫瘤があり，一部に潰瘍形成が認められた (Fig. 3a)。盲腸と Bauhin 弁には病変は認めなかった。上行結腸に頂部に潰瘍形成を有する隆起性病変を認めた (Fig. 3b)。

生検病理組織学的検査：核異型の強いリンパ球がびまん性に浸潤した像を呈し，それらの細胞は抗 LCA 抗体，抗 UCHL-1 抗体をもちいた免疫組織染色で陽性で (Fig. 4a)，抗 L-26 抗体をもちいた免疫組織染色で陰性で (Fig. 4b)，T 細胞性悪性リンパ腫と診断した。

開腹所見：開腹すると腹水，腹膜播種，肝転移は認めなかった。回腸末端から盲腸，上行結腸にかけて一塊となった手拳大の腫瘤を認めた。回盲部悪性リンパ腫の術前診断で右半結腸切除術を行った。腫大したリンパ節を認めたので転移の可能性を考慮し，大腸癌取扱い規約の 201, 202, 203, 211, 212, 213 にあたるリンパ節を郭清した。

切除標本肉眼所見：回腸末端に潰瘍性病変を認

Fig. 3 Colonoscopy : Nodular lesion and ulceration were seen on the terminal ileum (a) An elevated lesion was seen on the ascending colon. The top of that lesion was ulcerated (b)

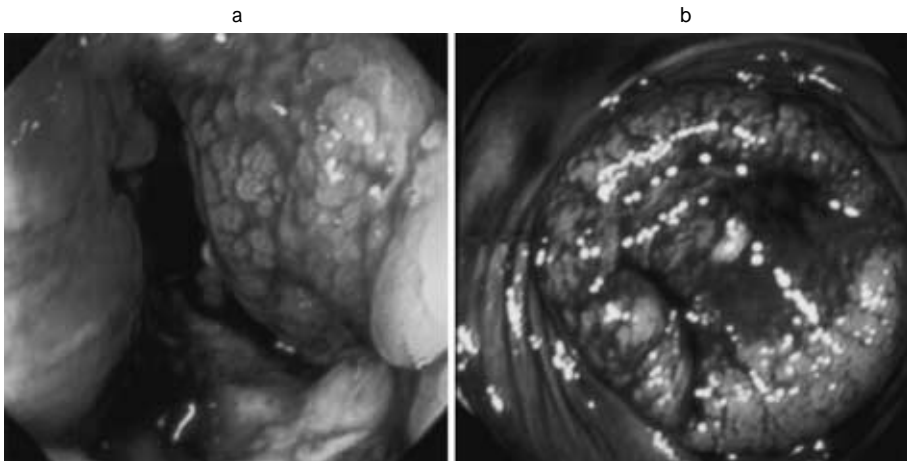
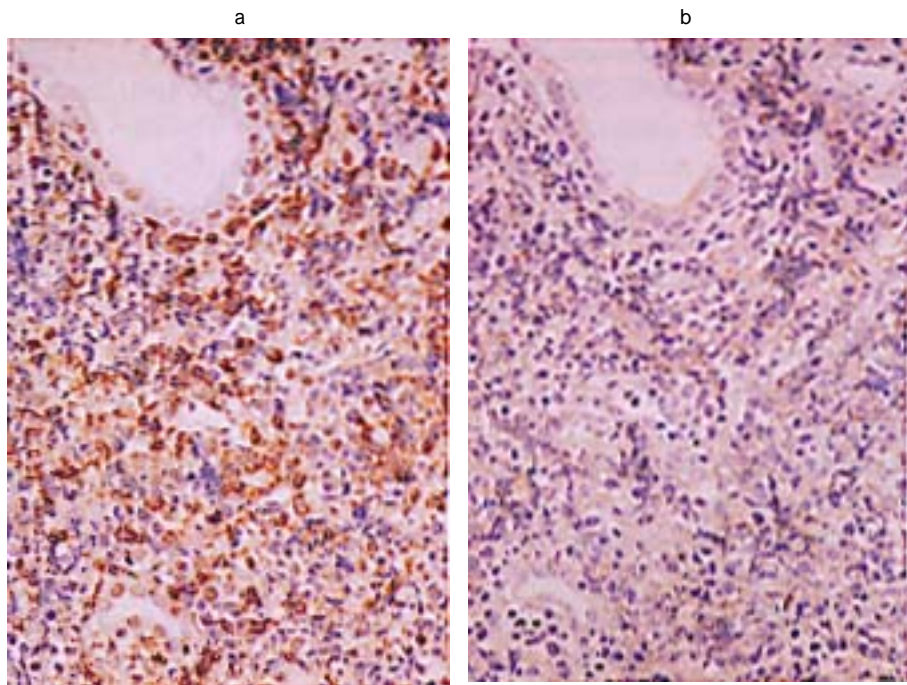


Fig. 4 Immunohistochemical staining of biopsy specimen (× 40) showed atypical lymphocytes positively stained for UCHL-1 (a) and negatively stained for L26 (b)

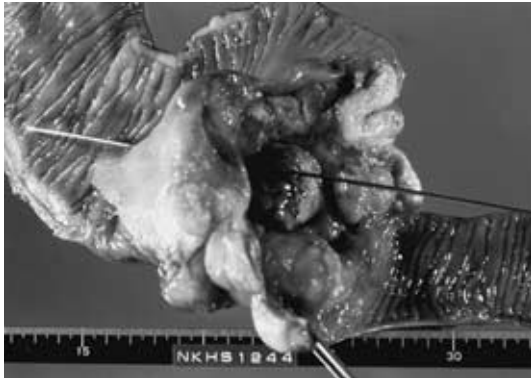


めた(Fig. 5) . 肉眼的には Wood の分類の ulcerative type であった¹⁾ . 潰瘍病変と上行結腸との間に瘻孔が確認された . 大腸内視鏡検査にて認めた

頂部に潰瘍形成を有する隆起性病変が瘻孔の開口部であった .

病理組織学的所見 : HE 染色では , 腫大した不

Fig. 5 The resected specimen showed ulceration of the terminal ileum and fistula formation between the terminal ileum and the ascending colon. A sonde was passed through the fistula. The Bauhin valve and the cecum were intact.



整な核を有する小型の異型細胞がびまん性に粘膜筋板から固有筋層にかけて浸潤増殖していた。これらの細胞は免疫組織染色にて LCA および UCHL-1 陽性、切除標本では更に cluster domain (以下, CD) 2, CD3, CD4, CD5, CD7 にも陽性であり T 細胞性悪性リンパ腫であると診断した。切断断端は陰性で、郭清したリンパ節に悪性細胞は認めなかった。Naqvi 分類にて stage I であった²⁾。

術後経過：術後に行った骨髄穿刺では悪性細胞は見られず、骨シンチは異常集積を認めなかった。術後に cyclophosphamide, adriamycin, vincristine, prednisolone 療法 (以下, CHOP 療法) を 4クール行った。2クール終了時の可溶性 IL-2 受容体は 565U/ml と正常範囲内に低下していた。術後 2年 8か月間経過した現在、再発は認めていない。

考 察

小腸原発の悪性腫瘍は消化管悪性腫瘍のうち 1~3% と少ない^{3,4)}。小腸悪性腫瘍のうち、悪性リンパ腫は癌に次いで頻度が高く、約 1/3 を占める⁵⁾。消化管悪性リンパ腫における小腸病変は 20~40% と比較的多い^{6,7)}。しかし、小腸原発の T 細胞性悪性リンパ腫の本邦報告例は本症例を含めて 18 例と少ない⁶⁾⁻¹⁵⁾。学会抄録に掲載された症例を加えても 46 例しか報告されていない。

Dawson ら¹⁶⁾は消化管原発悪性リンパ腫の診断

基準として、消化管病変が主体で転移は所属リンパ節のみで、表在リンパ節の腫大がないこと、胸部単純 X 線検査で縦隔リンパ節の腫大がないこと、末梢血の検査で白血化がないこと、肝臓・脾臓に腫瘍を認めないこと、をあげている。本症例はすべての項目を満たしており、小腸原発悪性リンパ腫と診断した。

本症例を含めた症例報告 18 例では、年齢は 17 歳から 89 歳で平均年齢 54.7 歳、男女比は 11:7 と男性に多い。手術のきっかけとしては消化管穿孔が 10 例と多かった⁸⁾⁻¹²⁾。腸閉塞で開腹した症例が 1 例であった¹³⁾。腹痛が主訴で経過観察中に穿孔した症例が 1 例あった⁸⁾。術前に T 細胞性悪性リンパ腫と診断がされた症例は本症例を含め 2 例しか報告されていない¹⁵⁾。本疾患は穿孔、腸閉塞などの急性腹症で発症することが多い。このため術前に詳細な検査を行うことが出来ない症例が大部分であり、術後の病理組織学的検査で確診されているのが現状である。本症例は右下腹部の腫瘤に対して小腸造影透視を行い、回腸末端病変と上行結腸の間の瘻孔が判明した。これまで報告された小腸原発悪性リンパ腫のうち術前に小腸造影透視を行った症例は少なく、瘻孔形成を認めた症例は本例も含め 2 例のみであった¹⁷⁾。

小腸原発 T 細胞性悪性リンパ腫は発症時すでに進行した症例が多い。予後の記載のあった 17 例中 9 例が 1 年以内に死亡し、うち 5 例は 3 か月以内に死亡していた。死亡した 9 例中 6 例が消化管穿孔のため緊急手術を施行しており、穿孔例の予後は不良であった。本症例は Naqvi 分類によると Stage I であるが、T 細胞性は悪性度が高いとされているので CHOP 療法による化学療法を併用した¹⁸⁾。文献的には、化学療法として CHOP 療法を施行した症例が多く、手術せず CHOP 療法のみで完全緩解となった症例が報告されている¹⁵⁾。本症例では術前に LDH、可溶性 IL-2 受容体が高値を示し、手術と化学療法の後で低下しており、LDH と可溶性 IL-2 受容体は再発、治療効果の指標となると思われた。

本症例は第 56 回日本消化器外科学会総会にて発表した (2001 年 7 月 26 日秋田市)。

文 献

- 1) Wood DA : Tumors of the intestines. Edited by Atlas of tumor pathology. Sect VI, Fasc 22 AFIP, Washington DC, 1967, p96 100
- 2) Naqvi MS, Burrows L, Kark AE : Lymphoma of the gastrointestinal tract : Prognostic guides based on 162 cases. Ann Surg 170 : 221 231, 1969
- 3) Sager GF : Primary malignant tumors of the small intestine. A twenty-two year experience with thirty patients. Am J Surg 135 : 601 603, 1978
- 4) Brookes VS, Waterhouse JAH, Powell DJ : Malignant lesions of the small intestine. A ten-year survey. Br J Surg 55 : 405 410, 1968
- 5) 八尾恒良, 八尾健史, 真武弘明ほか : 小腸腫瘍最近5年間(1995~1999)の本邦報告例の集計. 胃と腸 36 : 871 881, 2001
- 6) Freeman C, Berg JW, Cutler SJ : Occurrence and prognosis of extranodal lymphomas. Cancer 29 : 252 260, 1972
- 7) Amer MH, el-Akkad S : Gastrointestinal lymphoma in adults : Clinical features and management of 300 cases. Gastroenterology 106 : 846 858, 1994
- 8) 田畑峰雄, 迫田晃郎, 溝内十郎ほか : 悪性リンパ腫における穿孔性腹膜炎の検討. Studies on perforative peritonitis in patients with malignant lymphoma. 腹部救急の進歩 10 : 75 80, 1990
- 9) 平田静弘, 岸川英樹, 関川敬義ほか : 同時に多発した大腸小腸 T 細胞性悪性リンパ腫の1例. 日消外会誌 31 : 1902 1906, 1998
- 10) 青竹利治, 天谷博一, 打破大ほか : 穿孔をきたした空腸 T-cell lymphoma の1例. 日臨外会誌 61 : 680 684, 2000
- 11) 正木裕児, 岡田敏正, 定平吉都 : 同時性多発十二指腸, 小腸 T 細胞型悪性リンパ腫の1例. 日消外会誌 33 : 1775 1779, 2000
- 12) 正木ルナ, 前田壽哉, 大越修ほか : 穿孔性腹膜炎をきたした小腸原発 T 細胞性悪性リンパ腫の1例. 日本大腸肛門病会誌 54 : 247 252, 2001
- 13) 恵木浩之, 田部康次, 原秀孝ほか : 肺瘻術後に腸重積で発症した T 細胞性空腸悪性リンパ腫の1例. 消外 23 : 499 503, 2000
- 14) 知花洋子, 久保田徹, 仲吉朝史ほか : 小腸原発 T 細胞悪性リンパ腫の1例. 内科 86 : 386 386, 2000
- 15) 佐田美和, 小林清典, 勝又伴栄ほか : 内視鏡診断しえた小腸 T cell 系悪性リンパ腫の1例. 胃と腸 36 : 953 957, 2001
- 16) Dawson IMP, Cornes JS, Morson BC et al : Primary malignant lymphoid tumours of the intestinal tract : Report of 37 cases with a study of factors influencing prognosis. Br J Surg 49 : 80 89, 1961
- 17) 高橋祐, 長谷川洋, 小木曾清二ほか : 特異な形態を呈した小腸悪性リンパ腫の1例. 日臨外会誌 59 : 2314 2317, 1998
- 18) 中村昌太郎, 飯田三雄, 竹下盛重ほか : 小腸悪性リンパ腫の臨床病理学的特徴. 胃と腸 33 : 385 396, 1998

A Case of Preoperatively Diagnosed Primary T-cell Malignant
Lymphoma of the Ileum with Coloenteric Fistula

Sei-ichiro Jimi, Masayuki Hotokezaka, Shinji Matsumoto, Kei Fujii,
Keisuke Shibata*, Akihide Tanimoto** and Shigeaki Takeda

Department of Surgery, Department of Internal Medicine*, National Kokura Hospital
Second Department of Pathology, University of Occupational and Environmental Health**

We report a case of primary T-cell malignant lymphoma of the ileum diagnosed preoperatively. A 64-year-old man hospitalized for right lower quadrant pain and constipation demonstrated ulceration of the ileum on colonoscopy. Immunohistochemical staining of biopsy specimens showed the presence of T-cell malignant lymphoma. Radiographic studies of the small intestine elucidated fistula formation between the ileum and ascending colon. The huge ulceration and coloenteric fistula of the ileocecal region necessitated right hemicolectomy. T-cell malignant lymphoma is rare, and its prognosis is much poorer than that of B-cell lymphoma. We performed 4 courses of CHOP as adjuvant chemotherapy. The patients remains alive 2 years and 8 months postoperatively.

Key words : T cell lymphoma, small intestinal tumor, coloenteric fistula

【Jpn J Gastroenterol Surg 36 : 289 293, 2003】

Reprint requests : Sei-ichiro Jimi Department of Surgery, National Kokura Hospital
10 1 Harugaoka, Kokura Minami-ku, Kitakyushu city, 802 8533 JAPAN